

## 간내 담도암으로 오인된 간내 염증성 가성종양

연세대학교 원주의과대학 <sup>1</sup>내과학교실, <sup>2</sup>영상의학교실, <sup>3</sup>병리학교실박순민<sup>1</sup> · 김영인<sup>1</sup> · 박순창<sup>1</sup> · 고영빈<sup>1</sup> · 이경주<sup>1</sup> · 안지현<sup>2</sup> · 조미연<sup>3</sup> · 김재우<sup>1</sup>

## Liver Inflammatory Pseudotumor Mimicking Cholangiocarcinoma

Sun Min Park<sup>1</sup>, Young In Kim<sup>1</sup>, Soon Chang Park<sup>1</sup>, Young Bean Ko<sup>1</sup>, Kyong Joo Lee<sup>1</sup>, Jhii Hyun Ahn<sup>2</sup>, Mee Yon Cho<sup>3</sup>,  
Jae Woo Kim<sup>1</sup>Departments of <sup>1</sup>Internal Medicine, <sup>2</sup>Radiology, and <sup>3</sup>Pathology, Yonsei University Wonju College of Medicine, Wonju, Korea

Inflammatory pseudotumor of the liver is a benign disease which is histologically characterized by plasma cell infiltration and reactive fibrotic inflammation. Differentiating this disease from malignant tumor is not easy. The authors report a case of inflammatory pseudotumor mimicked as intrahepatic cholangiocarcinoma. A 74-year-old man visited the emergency department complaining of jaundice and myalgia which have lasted for 1 to 2 weeks. After computed tomography (CT) scan and magnetic resonance imaging of the liver, he was initially diagnosed with intrahepatic cholangiocarcinoma, but was ultimately found to be inflammatory pseudotumor after pathologic examination of the liver tissue. His symptoms improved after a course of antibiotic therapy and conservative treatment, and the lesion disappeared on follow-up CT scan.

**Received** Feb. 6, 2016  
**Revised** Jun. 2, 2016  
**Accepted** Jun. 3, 2016

**Corresponding author: Kyong Joo Lee**

Division of Gastroenterology and Hepatology,  
Department of Internal Medicine, Yonsei University  
Wonju College of Medicine, 20 Ilisan-ro, Wonju 26426,  
Korea  
Tel. +82-33-741-1221 Fax. +82-33-741-1228  
E-mail; smild123@yonsei.ac.kr

Korean J Pancreas Biliary Tract 2016;21(3):180-184

This is an Open Access article distributed under the terms of the  
Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0/>) which permits  
unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in  
any medium, provided the original work is properly cited.

**Keywords:** Liver, Cholangiocarcinoma, Inflammatory pseudotumor

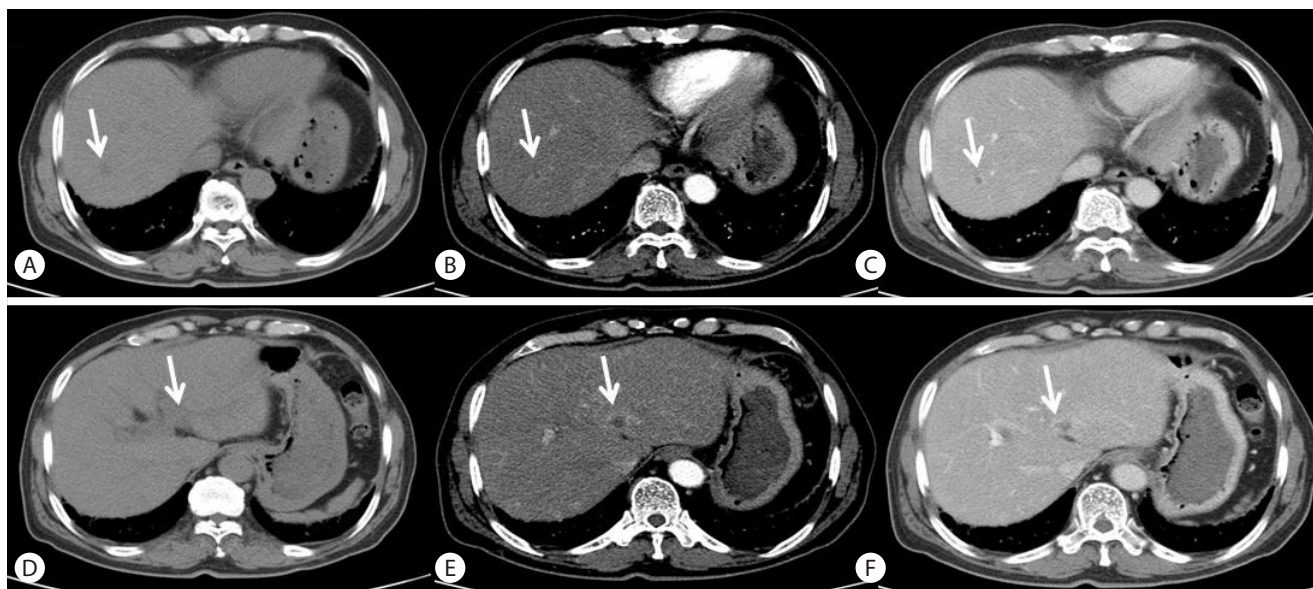
Copyright © 2016 by The Korean Journal of Pancreas and Biliary Tract

## 서 론

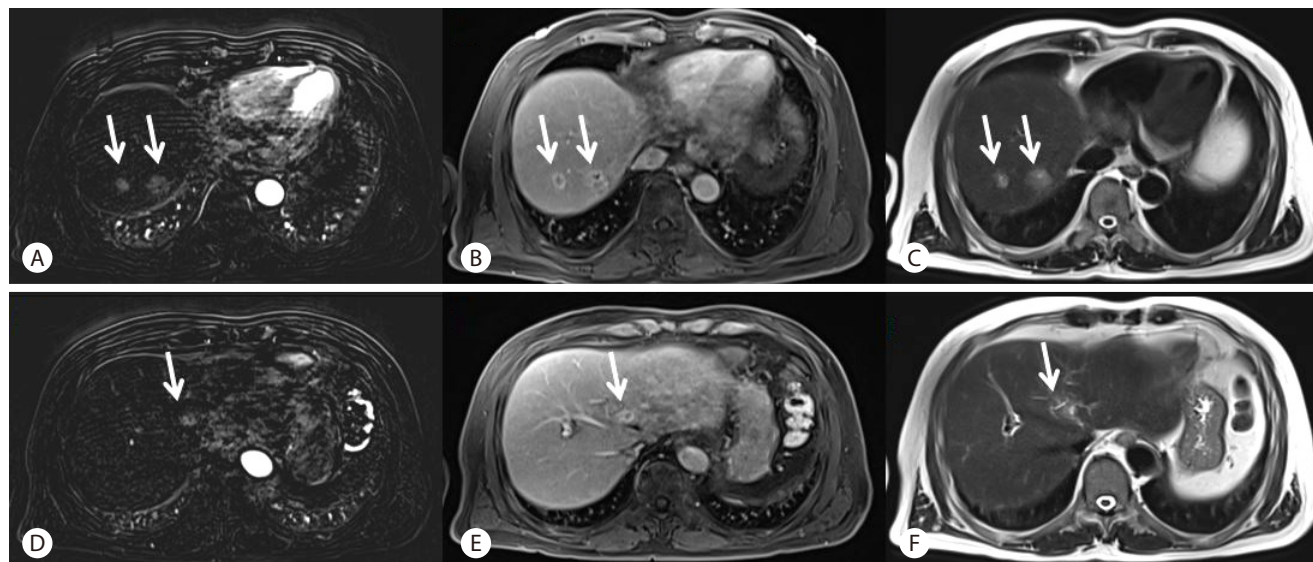
염증성 가성종양(inflammatory pseudotumor)은 조직학적으로 형질세포의 침윤 및 반응성 섬유성 염증을 특징으로 하는 양성 질환이다.<sup>1</sup> 염증성 가성종양은 몸의 어디에서든 생길 수 있다. 간의 염증성 가성종양은 1953년 Pack과 Baker<sup>2</sup>에 의해 처음 보고되었다. 서양에서 나오는 보고에 따르면 여자보다는 남자에서 자주 생기고 젊은 환자가 많다고 하였다.<sup>3</sup> 반면에 동양에서는 고령에서 나타나는 것이 특징이다.<sup>4</sup> 염증성 가

성종양은 대부분 양성이긴 하나 악성 종양과의 감별이 쉽지 않다. 수술보다는 항생제나 스테로이드 등 약물치료로도 호전될 수 있고 환자의 부담을 줄일 수 있다는 면에서 적극적인 진단이 필요하다. 염증성 가성종양은 국내외 적으로 몇 차례 증례가 보고되었고 국내에서도 최근 간내 담도암으로 생각되어 간절제술을 시행하였고 최종적으로 황색육아종성 담도염과 동반된 간의 염증성 가성종양으로 진단된 증례가 보고되었다.<sup>5</sup>

저자는 증상, 종양표지자, 영상의학적 소견에서 이전에 보



**Fig. 1.** Computer tomography showed multiple small ( $\leq 1.6$  cm) low density lesions with peripheral enhancement in liver (white arrow). (A) Small ( $\leq 1.6$  cm) lesion (segment 7) of low attenuation were noted on precontrast computer tomography (CT) images. (B) On contrast enhanced CT imaging, the lesion exhibited central enhancement in the arterial phase and (C) peripheral enhancement in the delayed phase. (D-F) Similar enhancement pattern was observed on another nodule located at segment 8.



**Fig. 2.** Magnetic resonance image showed multiple lesions in liver (white arrow). (A) The lesions (1.9 cm, 1.7 cm) (S7) showed nodular enhancement on T1 arterial phase images and (B) Peripheral rim enhancement on T1 portal phase images. (C) High signal intensity was also noted on T2 phase. (D-F) Similar signal intensity was found on a nodule located at segment 8.

고되었던 염증성 가성종양보다는 간내 담도암에 가까워 간내 담도암으로 오인된 염증성 가성종양 1예를 보고하는 바이다.

## 증 례

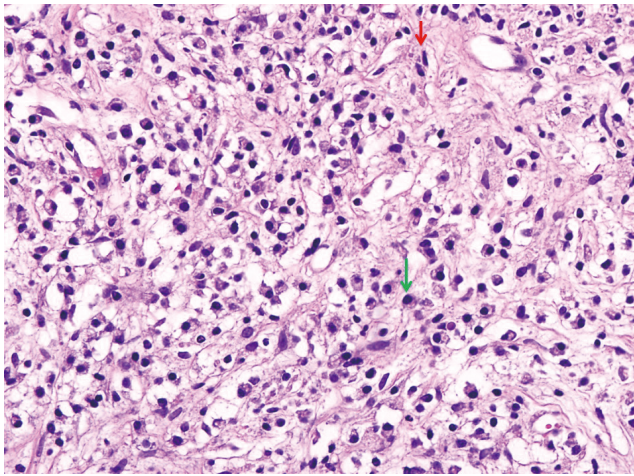
74세 남자가 1-2주 전부터의 근육통과 황달을 주소로 응급실 통해 입원하였다. 문진상 주 3회, 소주 1병 가량 음주 및

약 100갑년의 이전 흡연자이었고 당뇨, 전립선비대증으로 약물복용 중이었다. 내원 당시 활력 징후는 혈압 122/70 mmHg, 맥박수 104회/분, 호흡수 20회/분, 체온 37.2°C였으며, 신체검사에서 공막 황달이 관찰되었다.

말초혈액검사에서 백혈구 수  $5,740/\text{mm}^3$  (호중구 66.4%, 림프구 20.2%, 단핵구 7.9%), 혈색소 14.0 g/dL, 헤마토크릿 40.9%, 혈소판  $147,000/\text{mm}^3$ 였다. 일반 생화학검사에서 아스

파르테이트아미노전달효소 60 U/L, 알라닌아미노전달효소 74 U/L, 알칼리인산분해효소 115 U/L, 감마-글루타밀전이효소 353 U/L, 총 빌리루빈 5.56 mg/dL, 직접 빌리루빈 4.15 mg/dL, 알부민 3.7 g/dL, C-반응성 단백 7.32 mg/dL였다. 종양표지자로는 carcinoembryonic antigen (CEA) < 2 ng/mL, 혈청 알파태아단백질 3.9 ng/mL로 정상범위였으나, carbohydrate antigen 19-9 (CA 19-9) 125.2 U/mL로 증가되어 있었다. 면역 혈청 표지자로는 HBsAg (-), HBsAb (+), HCV Ab (-), HIV Ab (-)였다.

복부 전산화단층촬영에서 1.6 cm 이하의 테두리 조영증강되는 저밀도 병변들이 segment 6에 1개, segment 4에 1개, segment 7에 2개 총 4개가 보였고 담관 확장 또는 담낭 결석



**Fig. 3.** Pathology (A) Spindle cell (red arrow) proliferation with numerous blood vessels and severe plasma cell (green arrow) infiltration (HE  $\times$ 200).

은 관찰되지 않았다(Fig. 1). 복부 초음파검사에서 마찬가지로 여러 개의 저에코성 종괴가 양엽으로 관찰되었다. 이후 간 자기공명영상검사에서 총 4개의 병변이 있었고 T1영상에서 고신호감도 소견 보였다(Fig. 2A, 2B, 2D, 2E). 그리고 동맥기에서 결절성 조영증강을 보였으며(Fig. 2A, 2D) 문맥기에서 테두리 조영증강 소견을 보였다(Fig. 2B, 2E). 또한 T2영상에서도 고신호감도를 보였다(Fig. 2C, 2F).

환자의 첫 증상이 황달과 발열이었던 것으로 보아 담즙정체에 의한 담도염 발생하였을 가능성이 있다고 생각하였다. 담즙정체의 원인으로 CA 19-9 상승 및 영상의학적 검사결과를 고려하여 먼저 간내담도암 또는 전이성(다발성) 간종양을 의심하였다.

정확한 진단을 위해 초음파 유도 바늘 조직검사를 진행하였고 간 조직검사에서 방추세포의 증식과 다량의 형질세포 침윤소견이 보였다(Fig. 3). 감별진단을 위해 추가로 면역염색을 시행하였다. 멜라닌 세포성 종양 염색인 HMB45 염색, 근육종 염색인 actin 염색, 자가면역질환인 immunoglobulin G4 염색은 음성으로 나타났다. 최종적으로 염증성 가성종양으로 진단하였다. 경험적으로 광범위 3세대 세파계열 및 혐기성 항생제를 정맥주사로 1주간 유지하며 보존적 치료를 하였고 추후 증상이 호전되어 퇴원하였다. 혈액배양검사에서 동정된 균은 없었고 항생제 유지만으로 증상이 호전되어 스테로이드 및 비스테로이드 소염제는 사용하지 않았다. 이후 외래 추적관찰하며 항생제는 총 3주간 사용하였다. 6개월 이후 추적 복부 전산화단층촬영에서 간에 보였던 병변은 모두 사라졌다(Fig. 4).



**Fig. 4.** Previous lesions disappeared at follow up computed tomography taken 6 months later. (A) Previous segment 7 lesion is disappeared. (B) Previous Segment 8 lesion is disappeared).



## 고 찰

염증성 가성종양의 발병률은 약 0.7%로 보고되고 있다.<sup>1</sup> 염증성 가성종양의 병인 및 발병기전은 확실히 알려지지 않았으나 감염과 연관되어 있는 것으로 생각이 되기도 하며 박테로이데스 감염(bacteroides), 바퀴살균(actinomyces), 클레브시엘라(klebsiella), 대장균(escherichia coli), 그람양성 구균과 베타용혈성 연쇄상구균(gram-positive cocci and  $\beta$ -hemolytic streptococcus) 등의 균이 동정된 것으로 보고되었다.<sup>6</sup> 이는 여러 염증성 가성종양의 증례에서 항생제에 반응하였던 증례들이 감염과 관련된 것으로 설명된다. 또 다른 보고에서는 원인으로 할만한 다른 균이 보이지 않았고 이것은 IgG4와 같은 자가면역질환과 관련있을 수 있으며 이는 스테로이드치료에 효과가 있는 것으로 설명된다.<sup>7</sup> 또한 염증성 가성종양은 조직학적으로 여러 변이형이 있는데 이로 인해 염증성 가성종양은 염증성 근섬유모세포종(inflammatory myoblastic tumor), 형질세포육아종(plasma cell granuloma), 조직구종(histiocytoma), 섬유황색종(Firboxanthoma) 등으로 명명되기도 하였다. 이들 대부분은 양성 종양이다. 이는 염증성 가성종양의 발병기전이 종양과 같은 기전으로 발생하는 것으로 볼 수 있다.<sup>8</sup>

염증성 가성종양의 가장 흔한 증상은 복통, 고열 및 체중감소이다. 그러나 무증상도 있으며 비특이적인 임상양상을 보인다. 그리고 본 환자의 경우처럼 황달을 보이기도 한다.<sup>9</sup> 이때문에 염증성 가성종양이 림프종, 섬유조직구종, 간세포암, 전이성 암, 결핵 및 사코이드증 등으로 오인될 수 있다. 또한 혈액학적, 영상의학적 검사로 감별이 어려워 이는 종종 수술적 치료로 이어지기도 한다.<sup>10</sup> 본 증례의 환자도 복통과 황달을 주소로 내원하였고 CA19-9가 상승하였고 영상 검사에서 간내 담도암 또는 간전이로 판단되어 악성 종양을 먼저 생각하였다.

염증성 가성종양을 영상 검사로 진단하기에 쉽지 않으나 몇 가지 특징이 있다. 이전 증례들을 고려할 때 초음파에서 혼합 에코성으로 관찰되는 경우가 흔하다. 그러나 본 증례에서는 담도암 소견에 가까운 저에코성 병변으로 보여 처음 담도암으로 의심하게 되었다. 또한 복부 전산화단층촬영에서 다양한 조영증강 소견을 보인다. 조영전 영상에서 저밀도 병변으로 보이며 동맥기에서 불균질한 조영증강 및 테두리조영증강이 보인다. 평행기에서는 내부 저감약성 부분을 동반한 경계가 불분명한 고감약성 병변으로 보인다.<sup>11</sup> 섬유화로

인하여 혈관분포과소성 패턴을 보이고 또한 간의 전이성 암종이나 담도암처럼 지연성 조영증강도 보인다.<sup>12</sup> 본 증례에서는 복부 전산화단층촬영의 평행기에서 간내 담도암 소견에 가까운 테두리 조영증강되는 저밀도 병변들로 보였다.

자기공명영상에서의 특징은 T1 강조영상에서 저강도신호를 보이며 T2 강조영상에서는 대체로 동일하거나 고강도 신호를 보인다.<sup>13</sup> 그러나 본 증례에서는 복부 전산화단층촬영에서와 같이 T1 강조영상의 문맥기(평행기)에서 간내 담도암 소견에 가까운 테두리 조영증강 저밀도 병변이 보였다.

초음파보다는 복부 전산화단층촬영이나 자기공명영상의 염증성 가성종양을 감별하는데 도움을 줄 수 있다. 본 증례의 경우 진행한 복부 전산화단층촬영, 자기공명영상, 초음파에서 이전에 일반적으로 알려진 염증성 가성종양의 모습보다는 담도암 또는 전이성 종양의 소견에 가깝게 보여 담도암 또는 전이성 종양으로 오인하게 되었다는 점에서 이전에 보고되었던 염증성 가성종양의 증례와 비교해 중요한 의의가 있다.

본 증례에서처럼 조직검사를 통한 병리소견이 염증성 가성종양을 진단하는 데 있어서 가장 중요하다. 주된 조직병리검사는 근섬유모세포성의 방추세포, 포식세포, 세포 비정형이 없는 림프구 또는 유사분열 모양을 보인다.<sup>14</sup> 본 증례에서도 방추세포의 증식과 다량의 형질세포 침윤소견이 보였고 흑색종 감별진단을 위해 시행한 HBM-45 면역염색에서도 특이사항은 보이지 않았다.

염증성 가성종양에 대한 최적의 치료 및 예후를 결정하는 방법은 아직 정립되어 있지 않다. 염증성 가성종양 환자에서 항생제치료, 스테로이드치료 모두 효과가 있었다. 그러나 무엇이 더 우월한 치료인지에 대한 연구는 아직 부족하다.<sup>11</sup> 한 견해에서는 비록 염증성 가성종양이 항생제치료에 의해 호전 또는 자발적 호전을 보이더라도 수술적 치료가 필요하고 조직 검사로도 진단이 불확실할 경우, 심한 증상을 동반할 경우, 재발이 반복될 경우, 보존적 치료에 불응할 경우, 악성종괴와의 감별이 어려울 때 특별히 더 필요하다고 한다.<sup>15</sup> 또한 염증성 가성종양의 예후는 대부분 양성으로 알려져 있으나 악성으로의 변화가능성 또한 있을 수 있다.

경피적 바늘조직검사가 위험도가 낮고 쉽게 접근이 가능하므로 본 증례의 환자처럼 적극적 조직검사로 인해 불필요한 수술을 줄일 수 있었다. 이러한 염증성 가성종양은 최근 증가하고 있는 추세를 보이고 있다. 이는 영상의학적 검사 시행의 횟수 증가 및 복부 초음파 유도하 조직검사 시행의

빈도 증가에 의해 염증성 가성종양의 발견 횟수가 증가하는 것으로 생각된다.<sup>11</sup>

임상적, 생화학적, 영상학적 검사에서 악성종양과 구별할 수 있는 특이한 점이 많지 않기 때문에 불필요한 수술을 줄이기 위하여 간내 종괴의 진단에 대하여는 적극적인 조직검사가 필요하다.

## 요약

간의 염증성 가성종양(inflammatory pseudotumor)은 조직학적으로 형질세포의 침윤 및 반응성 섬유성 염증을 특징으로 하는 양성 질환이다. 이는 악성 종양과의 감별이 쉽지 않다. 저자들은 간내 담도암으로 오인된 염증성 가성종양 1예를 보고하는 바이다. 74세 남자가 1-2주 전부터의 근육통과 황달이 있어 입원하였다. 진행한 복부초음파, 복부 전산화단층촬영, 자기공명영상에서 간내 담도암으로 생각되었으나 간 조직검사에서 염증성 가성종양으로 진단되었다. 항생제 사용 및 보존적인 치료 후 증상이 호전되어 퇴원하였고 이후 추적 복부 전산화단층촬영에서 병변은 사라졌다.

**국문 색인:** 간, 담도암, 염증성 가성종양

## Conflicts of Interest

The author has no conflicts to disclose

## REFERENCES

1. Torzilli G, Inoue K, Midorikawa Y, Hui AM, Takayama T, Makuuchi M. Inflammatory pseudotumors of the liver: prevalence and clinical impact in surgical patients. *Hepatogastroenterology* 2001;48:1118-1123.
2. Pack GT, Baker HW. Total right hepatic lobectomy; report of a case. *Ann Surg* 1953;138:253-258.
3. White JE, Chase CW, Kelley JE, Brock WB, Clark MO. Inflammatory pseudotumor of the liver associated with extrahepatic infection. *South Med J* 1997;90:23-29.
4. Schmid A, Jänig D, Bohuszlavizki A, Henne-Bruns D. Inflammatory pseudotumor of the liver presenting as incidentaloma: report of a case and review of the literature. *Hepatogastroenterology* 1996;43:1009-1014.
5. Bae SK, Abiru S, Kamohara Y, et al. Hepatic inflammatory pseudotumor associated with xanthogranulomatous cholangitis mimicking cholangiocarcinoma. *Intern Med* 2015;54:771-775.
6. Ntinas A, Kardassis D, Miliaras D, Tsinoglou K, Dimitriades A, Vrochides D. Inflammatory pseudotumor of the liver: a case report and review of the literature. *J Med Case Rep* 2011;5:196.
7. Naitoh I, Nakazawa T, Ohara H, et al. IgG4-related hepatic inflammatory pseudotumor with sclerosing cholangitis: a case report and review of the literature. *Cases J* 2009;2:7029.
8. Chang SD, Scali EP, Abrahams Z, Tha S, Yoshida EM. Inflammatory pseudotumor of the liver: a rare case of recurrence following surgical resection. *J Radiol Case Rep* 2014;8:23-30.
9. Ke Q, Fan L, Duan X, He Z, Zheng S. Inflammatory pseudotumor mimicking primary hepatic malignant tumor with hepatitis B virus-related cirrhosis: A case report. *Oncol Lett* 2013;6:550-552.
10. Yang X, Zhu J, Biskup E, Cai F, Li A. Inflammatory pseudotumors of the liver: experience of 114 cases. *Tumour Biol* 2015;36:5143-5148.
11. Park JY, Choi MS, Lim YS, et al. Clinical features, image findings, and prognosis of inflammatory pseudotumor of the liver: a multicenter experience of 45 cases. *Gut Liver* 2014;8:58-63.
12. Fukuya T, Honda H, Matsumata T, et al. Diagnosis of inflammatory pseudotumor of the liver: value of CT. *AJR Am J Roentgenol* 1994;163:1087-1091.
13. Koea JB, Broadhurst GW, Rodgers MS, McCall JL. Inflammatory pseudotumor of the liver: demographics, diagnosis, and the case for nonoperative management. *J Am Coll Surg* 2003;196:226-235.
14. Iguchi H, Yamazaki H, Tsunoda H, Takahashi Y, Yokomori H. A Case of Inflammatory Pseudotumor of the Liver Mimicking Hepatocellular Carcinoma on EOB-MRI and PET. *Case Rep Med* 2013;2013:594254.
15. Nagarajan S, Jayabose S, McBride W, et al. Inflammatory myofibroblastic tumor of the liver in children. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* 2013;57:277-280.